Journal of Surgery
[Jurnalul de Chirurgie]

Case Report Open Access

Torsiunea mucocelului apendicular: prezentare de caz și revizuire a literaturii

Vlad Nuțu[1], Axentioi Ana Maria[1], Varlot Samantha[1], Ciobanu Delia [2,3], Lozneanu Iudmila[2,3], Crumpei Felicia[1], Rusu Andrieși Delia Florina[1]

1.Clinica I Chirurgie, Universitatea de Medicină și Farmacie "Grigore T. Popa", Spitalul Clinic de Urgențe "Sf. Spiridon" Iași

2. Departamentul de Științe Funcționale I. Universitatea de Medicină și Farmacie "Grigore T. Popa",

3.Deprtmentul de Patologie Spitalul Clinic de Urgențe "Sf. Spiridon" Iași

Abstract. Appendiceal mucocele torsion: case report and review of the literature. Appendiceal mucocele represents the cystic dilatation of the ileocecal appendix by blocked secretion of intralumenal mucus caused by: cystic retention (simple mucocele), mucosal hyperplasia, mucinous cystadenoma and mucinous cystadenocarcinoma. A rare complication is torsion of the appendiceal mucocele, usually secondary, mimicking acute appendicitis. The authors report a case of secondary volvulus of the vermiform appendix with mucocele in a 73-year-old patient hospitalized with clinical signs of acute appendicitis. Abdominal ultrasound and computed tomography suspect an appendiceal mucocele. The surprise comes from the surgical exploration that identifies a volvulus of an appendicular mucocele. It is devolved and classical appendectomy is performed. The surprise comes from the histopathological examination which shows a low-grade appendiceal mucinous neoplasm (LAMN): pTis LG LOVOPnORO, without invasion, section of the base of the appendix normal.The literature on secondary appendiceal torsion, imaging diagnosis and treatment of this rare complication is reviewed.

Cuvinte cheie: apendice, mucocel, torsiune, apendicectomie

Torsiunea unui mucocel apendicular este rară, cu o prezentare clinică similară apendicitei acute, diagnosticul fiind precizat mai ales intraoperator.

Torsiunea apendiculară a fost descrisă pentru prima dată de Payne în 1918. S-au raportat suficiente cazuri care demonstrează că practic tabloul clinic este identic cu apendicita acută (cit 1). Torsiunea apendicelui poate fi primară sau secundară altor patologii.

Torsiunea primară a apendicelui, mai frecventă la copii și adolescenți este favorizată de prezența unui apendice lung cu mezoapendice în formă de evantai cu o bază îngustă (2). Torsiunea secundară este cauzată de o anomalie apendiculară: coprolit (3), chistadenom mucinos (4,5), mucocelul (6), o tumoare carcinoidă (7), aderențe pericecale (8) sau lipomul (9).

Raportăm un caz de volvulus secundar al apendicelui vermiform cu mucocel și trecem în revistă literatura despre torsiune apendiculară secundară.

Bolnav în vârstă de 73 de ani, cu multiple comorbidități (HTA, diabet zaharat tip 2, steatohepatită) s-a prezentat în clinică dureri abdominale în fosa iliacă dreaptă, greață, amețeli, astenie.. Pacientul a suferit episoade ocazionale și tranzitorii de disconfort abdominal , cu dureri în fosa iliaca dreaptă în ultimul an. În urmă cu 14 zile s-a practicat în ambulator o polipectomie colonoscopică pentru polip colonic sesil de 14/4 mm situat la 140 cm de marginea anală ;

Corresponding author: Rusu Florina Delia

Received: December 15, 2022; **Accepted December** 20, 2022; **Published December** 30, 2022

Citation: Vlad,N, Axentioi Ana-Maria, Varlot Samantha, Ciobanu Delia, Lozneanu Ludmila, Crumpei Felicia, Rusu Andrieși Delia Florina,: **Appendiceal mucocele torsion: case report and review of the literature** Journal of Surgery [Jurnalul de chirurgie]. 2022; 18(4): 314 - 320, [Article in Romanian]. DOI: 10.22551/JSURG.2022.04.08

Copyright: © 2022V. Nutu V.. This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original author and source are credited

examenul hitopatologic a aratat un polip adenomatos tubular cu displazie de grad înalt.

Pacientul era afebril, cu stare generală relativ bună. La internare bolnavul prezintă la examenul local un abdomen cu panicul adipos bogat reprezenta, care participă la mişcările respiratorii cu sensibilitate la palpare profundă în cadranul inferior drept, fără semne de iritație peritoneală. Manevra Lapinski Jaworski este pozitivă. Tuşeul rectal evidențiază hemoroizi interni grad II, necomplicați. Examenele de laborator arată doar o glicemie de 185 mg/dl, uree sanguină 64 mg/dl, un nivel al hemoglobinei de 13,2g/dl și un număr normal de globule albe, cu un nivel al proteinei C reactive normal (0,23 mg/dl). Analiza urinei a fost negativă.

Ecografia abdominală evidențiază ficat mărit de volum, steatozic, chist renal drept polar superior de 30 mm, chist renal cortical stâng de 23 mm. și o formațiune hipoecogenă tubulară de 82/53/84 mm în fosa iliacă dreaptă, ataşată cecului (mucocel apendicular) (Fig. 1).

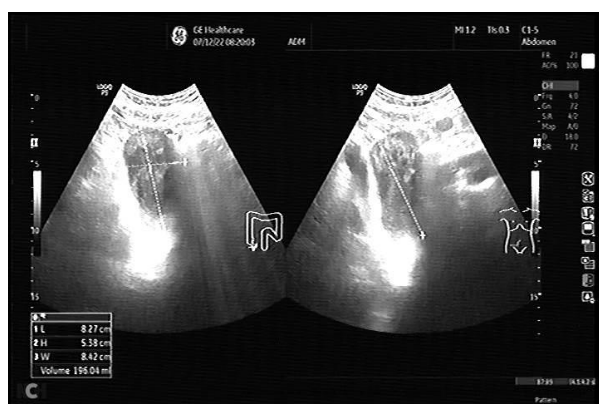


Fig. 1. Ecografie abdominală: formațiune hipoecogenă tubulară de 82/53/84 mm în fosa iliacă dreaptă, ataşată cecului (mucocel apendicular).

Pentru a caracteriza descoperirea apelăm la CT abdomino – pelvin cu substanță de contrast care evidențiază chisturi corticale renale bilaterale, și o formațiune chistică de 42/83mm cu densități parafluide localizată în fosa iliacă dreaptă în contact cu apendicele , fără lichid și adenopatii intraperitoneale; aspectul pledează pentru un mucocel apendicular, cu edem în mezoapendice și o diminuare lumenului apendicelui la baza sa (Fig.2)

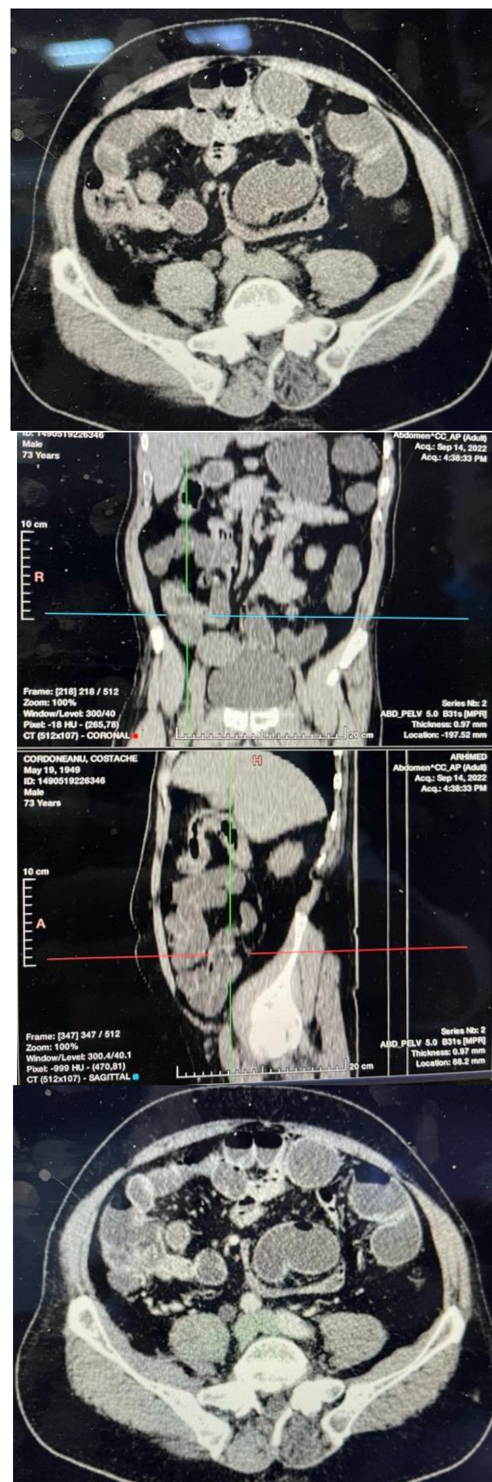


Fig. 2. CT abdomino-pelvin cu substanță de contrast: formațiune chistică de 42/83mm cu densități parafluide localizată în fosa iliacă dreaptă în contact cu apendicele , fără lichid și adenopatii intraperitoneale

Pe baza rezultatelor imagistice și a prezentării clinice, cu diagnosticul de mucocel apendicular s-a intervenit clasic prin laparotomie, pentru nu risca ruptura și contaminarea cavității peritonele, perforația fiind iminentă. S-a observat un apendice globulos, albicios în tensiune de 11/5 cm, acoperit de seoasă lucioasă cu perete hipervascularizat, cu o torsiune de 180 de grade în sensul acelor de ceasornic la nivelul bazei sale (Figura 3,4). Cavitatea abdominală era normală macroscopic, fără semne de diseminare. S-a efectuat detorsiunea apendicelui și s-a practicat apendicectomie, având grijă să nu se perforeze specimenul. Apendicele secționat conținea un gel alb-galbui. Examenul macroscopic a arătat distensia apendicelui cu aplatizarea mucoasei. Apendicele era intact, fără semne de extravazare a mucusului. Pe secțiune se constată un conținut gelatinos tipic pentru mucocel (Fig 4).





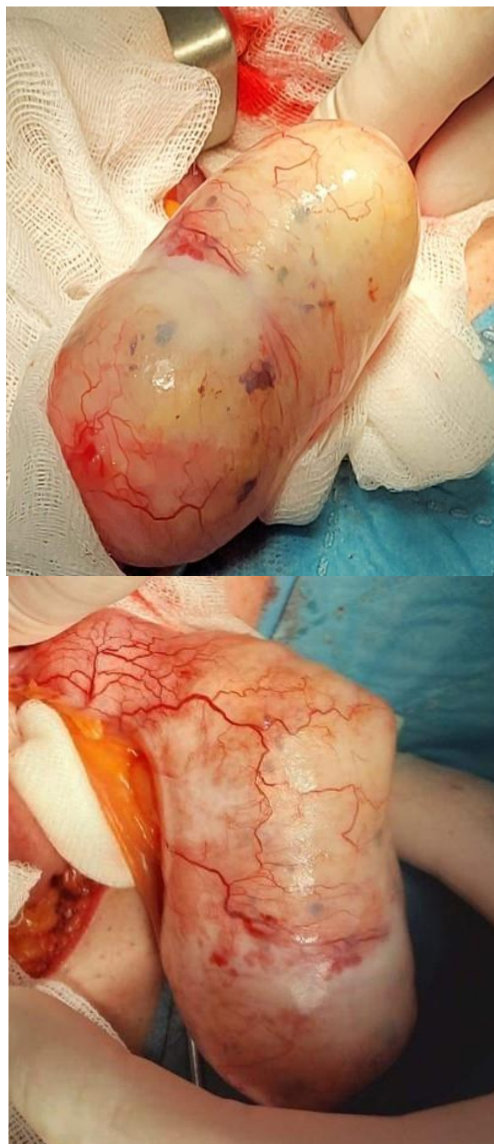


Fig.3. Mucocel apendicular volvulat și apoi devolvulat



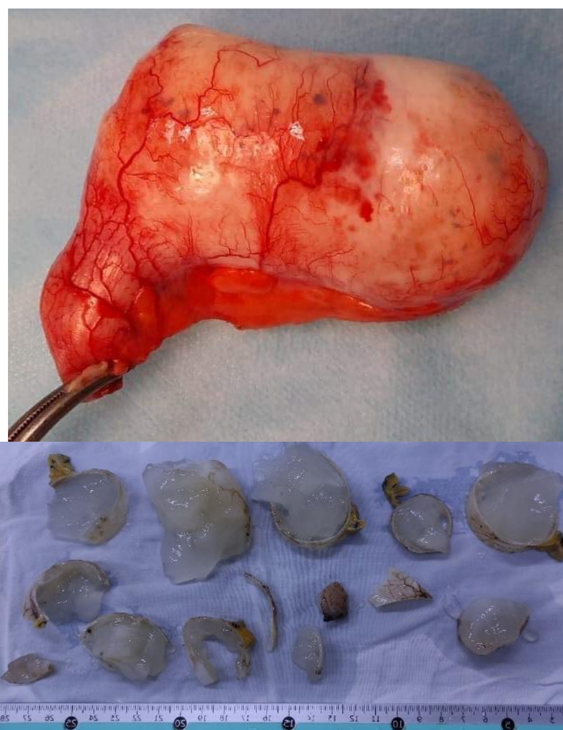


Fig. 4. Mucocel apendicular – piesă de apendicectomie și aspect macroscopic pe secțiune

Evoluția postoperatorie a fost simplă, pacientul fiind externat a treia zi.

Surpriza o aduce examenul histopatologic: multiple fragmente apendiceale examinate, prezintă, pe toata lungimea apendiceală, lumen dilatat prin importante depozite de mucus acelular localizate, la nivelul mucoasei, submucoasei, și focal, până la nivelul muscularei proprii. Se mai constată pierderea țesutului limfoid și a mucoasei in totalitate, acestea fiind înlocuite cu un epiteliu simplu cilindric, focal cu aspect filiform, vilos, cu atipie minima (displazie de grad scăzut), ce asociază intracitoplasmatic vacuole mucinoase înalte, cu nuclei ovalari sau pseudo stratificați, fără activitate mitotica evidenta. La seroasa nu se identifica depozite fibrino-leucocitare. Margine radiala liberă, fără depozite de mucus. Tranșa apendiceală, fără displazie. Peretele apedicelului prezintă marcată fibroză parietală, moderat infiltrat inflamator limfo-plasmocitar, calcificări distrofice și congestie vasculară. Aspectele morfologice identificate sunt compatibile cu un neoplasm mucinos apendiceal de grad scăzut (LAMN): pTis LG LOVOPnORO.) Fig.5,6,7,8,9).

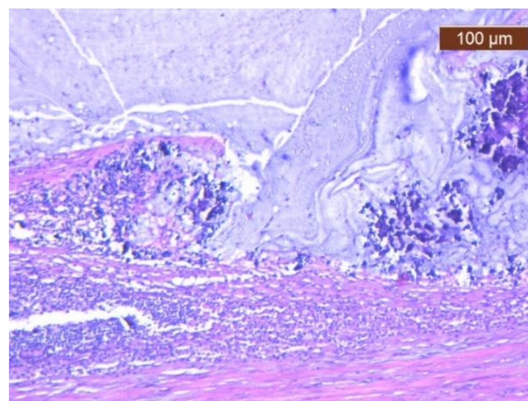


Fig. 5. Apendice cu dilatarea lumenului prin secreție mucinoasă, denudare epitelială, fibroză murală, infiltrat inflamator moderat și calcificare. (HEx10).

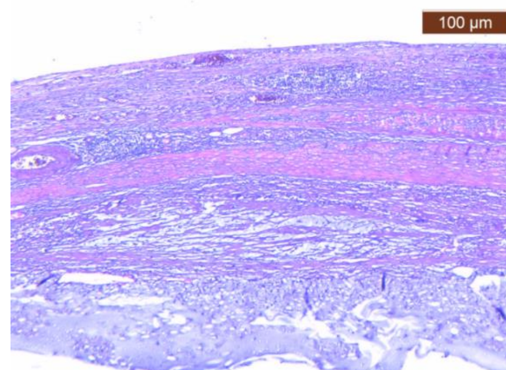


Fig. 6. Perete apendice cu secreție mucinoasă și pierderea de criptelor (HEx10).

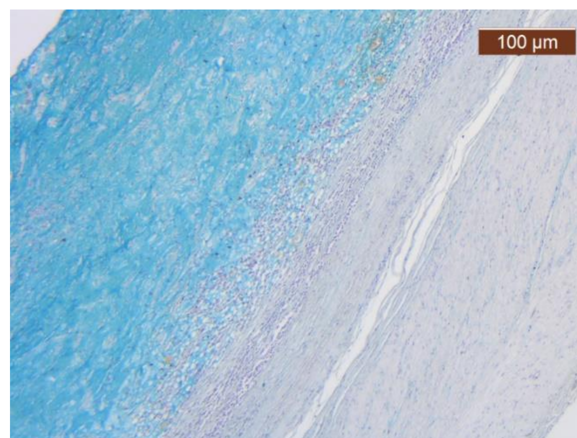


Fig. 7. Atrofia țesutului limfoid subiacent) și ștergerea mucoasei musculare (ABx10.

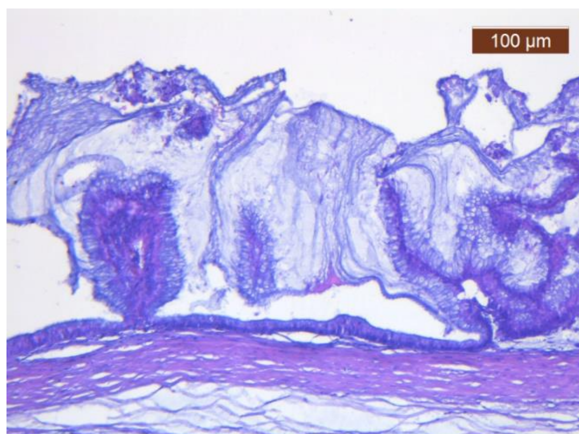


Fig. 8 Proliferarea viloasă a celulelor epiteliale mucinoase cu caracteristici displazice scăzute, nuclei ovali fără activitate mitotică evidentă (HEx10).

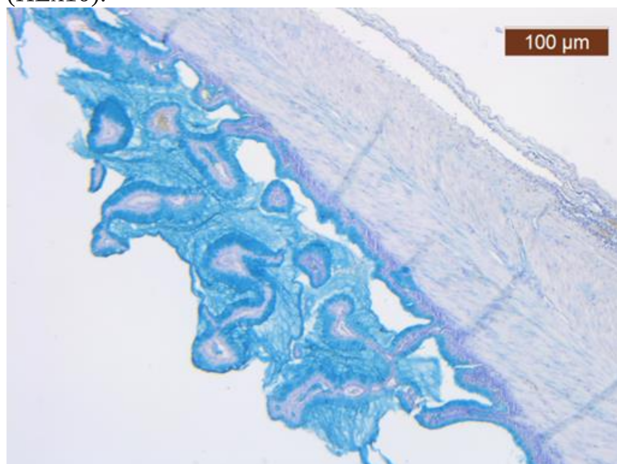


Fig. 9. Proliferarea micropapilarității epiteliului mucinos cu mucină apicală, nuclei alungiți și atipie nucleară de grad scăzut (Alcian Blue x10).

Discuții

Mucocelul apendicular reprezintă dilatația chistică a apendicelui ileocecal prin secreție blocată de mucus intralumenal provocată de: retenție chistică (mucocel simplu), hiperplazie mucoasă, chistadenom mucinos și chistadenocarcinom mucinos. Mucocelul apendicular este deci un termen descriptiv generic, care se referă la un apendice destins de mucus, secundar unui chistadenom (63%), hiperplaziei mucoase (25%), chistadenocarcinomului (11%) sau blocării lumenului apendicular (chist de retenție, endometrioză, carcinoid etc.)(10,11) .

Mucocelul apendicular este rar, întâlnindu-se la 0,25% din apendicectomii și reprezintă 8% din tumorile apendiculare (10). Cel mai frecvent, mucocelul este descoperit incidental cu ocazia unei explorări imagistice de rutină sau a explorării chirurgicale (chirurgie deschisă sau laparoscopie), poate mima o apendicită acută. Creșterea presiunii intralumenale poate determina perforația mucocelului, spontană, prin volvulare sau în cursul manevrelor chirurgicale, rezultând diseminarea conținutului mucoid în cavitatea peritoneală, ceea ce duce la *pseudomyxoma peritonei.* transformând această complicație într-una cu evoluție gravă și tratament specific10-15%.(11) O complicație rară citată în literatură este reprezentată de torsiunea mucocelului apendicular, care mimează o apendicită acută (12,13). Astfel în literatura engleza sunt prezentate doar 12 cazuri de torsiunea secundară a apendicelui din cauza unui mucocel , documentate imagistic în special IRM (13).

Evaluarea preoperatorie a acestei afecțiuni este o provocare și diagnosticul final este de obicei stabilit intraoperator. Din punct de vedere ecografic, mucocelul se prezintă de obicei ca leziuni chistice regulate hipoecogene [13]. Pe tomografia computerizată modificările sunt bine circumscrise, apendicele este mărit de volum și conține mucus. La IRMN leziunile sunt hiperintense pe secvențele ponderate T2 și hipo- sau izointense pe secvențele ponderate T1. Au fost descrie unele caracteristici ale constatărilor imagistice în AM cu torsiune. Hebert*et al.* a arătat învârtirea mezenterului apendicular pe tomografie computerizată indică torsiunea apendiculară (14).

În cazul nostru, rezultatele imagistice au indicat un mucocel apendicular, dar nu a afirmat volvulus. Discriminarea dintre mucocelul simplu și cele complicat chiar prin imagistica performantă de astăzi este dificilă.

Indicația de tratament chirurgical este absolută, alfel mucocelul se poate rupe și produce pseudomixoma peritoneii, greu de tratat. Există o reticență privind abordul laparoscopic, dar este fezabil în majoritatea cazurilor (11, 13, 15,16). Laparoscopia promptă a oferă diagnosticul macroscopic definitiv și a permite

îndepărtarea în siguranță a apendicelui bolnav. În cazurile în care marginile de rezecție sunt negative și muocelul intact, apendicectomia simplă este considerată suficientă. Diagnosticul histopatologic final este esențial pentru atitudinea ulterioară. Dacă nu există invazie a peretelui, a seroasei sau compartimentelor înconjurătoare (limfonoduli) apendicectomia simplă este suficientă. În caz contrar este necesară o rezecție de cec sau hemicolectomia dreaptă.

În cazul prezentat patologia de bază a fost neoplasm mucinos apendiceal de grad scăzut fără invazie, iar apendicectomia simplă a fost curativă, fără a fi nevoie de tratamente suplimentare. Bolnavul trebuie urmărit pe termen lung, mai ales că mucoasa colonului este displazică, iar această asociere nu este întâmplătoare..

În **concluzie**, torsiunea apendicelui vermiform la adult este o tulburare rară, de obicei secundară unui mucocel și provoacă simptome abdominale care nu se pot distinge clinic de apendicita acută. Diagnosticul preoperator este dificil, iar apendicectomia precizează diagnosticul, fiind salutară în majoritatea cazurilor. Când un pacient prezintă dureri abdominale care indică apendicita, torsiunea apendicelui vermiform trebuie luată în considerare în diagnosticul diferențial, iar posibilitatea unei leziuni premaligne sau maligne trebuie luată în considerare..

Declarația de conflict de interese.

Autorii declară că nu se află în conflict de interese financiare sau nonfinanciare pentru datele și informațiile prezentate în articol. A fost obținut consimțământul informat scris de la pacientă pentru publicarea acestui raport de caz și a imaginilor însoțitoare.

Bibliografie

1. Lee CH, Lee MR, Kim JC, Kang MJ, Jeong YJ. Torsion of a mucocele of the vermiform appendix: a case report and review of the literature. J Korean Surg Soc. 2011 Dec;81 Suppl 1(Suppl 1):S47-50. doi: 10.4174/jkss.2011.81.Suppl1.S47. Epub 2011 Nov 25.
2. Gopal K, Kumar S, Grewal H. Torsion of the vermiform apendix. *J Pediatr Surg*. 2005; 40 :446–447.
3. Wani I, Kitagawa M, Rather M, Singh J, Bhat G, Nazir M. Torsion of vermiform appendix with fecalith: a case report. Cases J. 2008 Jun 23;1(1):20. doi: 10.1186/1757-1626-1-20. PMID: 18577201; PMCID: PMC2442045.
4. Mishin I, Ghidirim G, Zastavnitsky G, Popa C. Torsion of an appendiceal mucinous cystadenoma. Report of a case and review of literature. Ann Ital Chir. 2012 Jan-Feb;83(1):75-8. PMID: 22352223.
5. Kitagawa M, Kotani T, Yamano T, Tsurudome H, Hatakeyama T, Kuriu Y, Nishi H, Yabe M. Secondary torsion of vermiform appendix with mucinous cystadenoma. Case Rep Gastroenterol. 2007 Jun 26;1(1):32-7. doi: 10.1159/000104679. PMID: 21487469; PMCID: PMC3073785.
6. Knol ME, de Leede EM, van Beurden A. Torsion of a mucocele of the veriform appendix: report of a case. J Surg Case Rep. 2020 Nov 27;2020(11):rjaa442. doi: 10.1093/jscr/rjaa442. PMID: 33274042; PMCID: PMC7694596.
7. CASSIE GF. Torsion of mucocele of the appendix caused by a carcinoid tumour. Br J Surg. 1953 Jul;41(165):105-6. doi: 10.1002/bjs.18004116528. PMID: 13082023.
8. Wani I, Maqbool M, Sheikh T. Secondary torsion of vermiform appendix. J Emerg Trauma Shock. 2010 Apr;3(2):206-7. doi: 10.4103/0974-2700.62126. PMID: 20606807; PMCID: PMC2884461.
9. Killam AR. An unusual cause of appendicitis: torsion produced by a mesoappendiceal lipoma. Am Surg. 1969 Sep;35(9):648-9. PMID: 5810492.
10. Ruiz-Tovar J, Teruel DG, Castiñeiras VM, Dehesa AS, Quindós PL, Molina EM. Mucocele of the appendix. *World J Surg*. 2007 Mar;31(3):542-8.

11. Tărcoveanu E, Vasilescu A, Hee RV, Moldovanu R, Ursulescu C, Ciobanu D, Bradea C. Appendicular Mucocele: Possibilities and Limits of Laparoscopy. Brief Series and Review of the Literature. Chirurgia (Bucur). 2015 Nov-Dec;110(6):530-7. PMID: 26713827.
12. Dos Santos S, Mongin C, Humeau M. Volvulus of the appendix secondary to appendicular mucocele. J Visc Surg. 2022 Aug;159(4):347-348. doi: 10.1016/j.jviscsurg.2021.11.008. Epub 2021 Nov 27. PMID: 34848161.
13. Stark C, Jousi M, Enholm B. Preoperative assessment and treatment of appendiceal mucocele complicated by acute torsion: a case report. BMC Res Notes. 2014 Jan 2;7:1. doi: 10.1186/1756-0500-7-1. PMID: 24382056; PMCID: PMC3879997.
14. Hebert JJ, Pickhardt PJ. MDCT diagnosis of an appendiceal mucocele with acute torsion. AJR Am J Roentgenol. 2007 Jul;189(1):W4-6. doi: 10.2214/AJR.05.1490. PMID: 17579135.
15. Aggarwal N, Bhargava A. Appendiceal mucocele secondary to torsion in an asymptomatic patient. J Surg Case Rep. 2019 Aug 14;2019(8):rjz241. doi: 10.1093/jscr/rjz241. PMID: 31428310; PMCID: PMC6693393.
16. Chiarenza SF, Costa L, Bleve C. Torsion of cecal appendix. Report of the first Italian case and review of the literature. Pediatr Med Chir. 2021 May 7;43(1). doi: 10.4081/pmc.2021.251. PMID: 33960760.